



TITLE:

# 嚢胞状変化を伴った副腎褐色細胞腫の1例

AUTHOR(S):

児島, 康行; 菅尾, 英木; 横川, 潔; 滝内, 秀和; 櫻井, 勲;  
小林, 伸行; 小林, 晏

---

CITATION:

児島, 康行 ...[et al]. 嚢胞状変化を伴った副腎褐色細胞腫の1例. 泌尿器科  
紀要 1988, 34(7): 1201-1205

ISSUE DATE:

1988-07

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/119641>

RIGHT:

## 嚢胞状変化を伴った副腎褐色細胞腫の1例

大阪厚生年金病院泌尿器科 (部長: 櫻井 勲)

児島 康行, 菅尾 英木, 横川 潔, 滝内 秀和, 櫻井 勲

大阪厚生年金病院放射線科 (部長: 藤村哲夫)

小 林 伸 行

大阪厚生年金病院病理検査科 (部長: 小林 晏)

小 林 晏

## A CASE OF CYSTIC PHEOCHROMOCYTOMA

Yasuyuki KOJIMA, Hideki SUGAO, Kiyoshi YOKOKAWA,  
Hidekazu TAKIUCHI and Tsutomu SAKURAI

*From the Department of Urology, Osaka Kosei-Nenkin Hospital  
(Chief: Dr. T. Sakurai)*

Nobuyuki KOBAYASHI

*From the Department of Radiology, Osaka Kosei-Nenkin Hospital  
(Chief: Dr. T. Fujimura)*

Yasushi KOBAYASHI

*From the Department of Pathology, Osaka Kosei-Nenkin Hospital  
(Chief: Dr. Y. Kobayashi)*

A case of cystic pheochromocytoma is reported. A 64-year-old man was referred to our hospital because of right flank pain and gross hematuria. Excretory urography showed an inferior displacement of his right kidney, and right suprarenal mass was suspected. CT and ultrasonographic findings suggested that the most likely diagnosis was cystic adrenal tumor. Right adrenal tumor was removed through a transverse abdominal incision on October 15, 1986. During the procedure, the blood pressure rose to 260/100 mmHg at the time of tumor manipulation. The histological diagnosis was pseudocystic pheochromocytoma. Pathogenesis of cystic adrenal tumor is discussed briefly.

(Acta Urol. Jpn. 34: 1201-1205, 1988)

**Key words:** Pheochromocytoma, Cystic adrenal tumor

### 緒 言

副腎の cystic lesion は比較的稀な疾患とされてきたが, 最近の画像診断の進歩に伴い, その報告例は増加している. 今回われわれは, 腹部エコーおよび CT にて嚢胞状の副腎腫瘍を認め, 組織学的に偽嚢胞を形成した副腎褐色細胞腫と診断した1例を経験したので報告する.

### 症 例

症例: M.H., 64歳, 男性  
主訴: 右側腹部痛, 肉眼的血尿

家族歴: 兄, 喉頭癌にて死亡, 姉, 甲状腺癌の既往があるが, 組織型は不明である.

既往歴: 61歳時, 胃潰瘍, 糖尿病. 高血圧の既往なし.

現病歴: 1986年9月上旬より右側腹部痛があり, 9月中旬より肉眼的血尿が出現してきた. 近医を受診し, 腹部エコーおよび CT にて右腎の上方に腫瘍が認められたため, 精査, 治療を目的として10月6日当科に入院となった.

入院時現症: 身長 160 cm, 体重 60 kg, 脈拍72/分で整, 血圧 140/90 mmHg, 甲状腺触知せず. 胸部異常なし. 腹部は肝を2横指触知, 右腎下極を触知し

た。眼底に軽度高血圧性変化を認めた。

入院時一般検査成績：末梢血 RBC  $445 \times 10^4/\text{mm}^3$ , Hb 14.1 g/dl, Ht 42.5%, WBC  $8,500/\text{mm}^3$ , Plt  $19.9 \times 10^4/\text{mm}^3$ , ESR 1 h: 17 mm, 2 h: 45 mm, 血液生化学 Na 148 mEq/l, K 4.8 mEq/l, Cl 107 mEq/l, Ca 9.8 mg/dl, BUN 12 mg/dl, Cr 1.0 mg/dl, 肝機能異常なし。甲状腺機能異常なし。FBS 112 mg/dl, 50 g OGTT borderline, 検尿：顕微鏡的血尿を認める以外正常。胸部 X-P, ECG: 正常。内分泌学的検査所見は Table 1 に示したが、尿中 metanephrine と VMA は軽度上昇、また尿中 normetanephrine は正常の約13倍高値を示していた。

Table 1. 内分泌学的検査

血中 Adrenaline	0.03 ng/ml	尿中 VMA	5.6 mg/day
血中 Noradrenaline	0.09 ng/ml	尿中 HVA	1.9 mg/day
尿中 Adrenaline	4.5 $\mu\text{g/day}$	血中 Cortisol	12.6 $\mu\text{g/dl}$
尿中 Noradrenaline	66.7 $\mu\text{g/day}$	尿中 17-KS	7.4 mg/day
尿中 Metanephrine	0.25 mg/day	尿中 17-OHCS	1.8 mg/day
尿中 Normetanephrine	3.25 mg/day	PRA	0.2 ng/ml/hr ↓
		PAC	16 pg/ml

画像検査所見：KUB では異常な石灰化は認めず、DIP で右腎の下方偏位を認めた (Fig. 1)。腹部エコーでは右腎上方に一部実質を伴う円形の嚢胞様陰影が抽出された (Fig. 2-A, B)。CT では右腎前上部に、円形の充実性腫瘍を認め (Fig. 3-A)，内部に鏡面形成を伴う嚢胞様変化がみられ、腫瘍内の古い出血が疑われた (Fig. 3-B)。右腎動脈造影動脈相では腎内動脈分枝に異常は認めないが、矢印で示した右下副腎動脈の分枝は腫瘍を囲むように伸展している (Fig. 4)。



Fig. 1. DIP

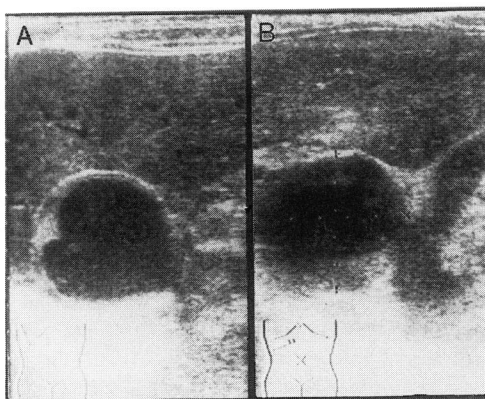


Fig. 2-A, B. 腹部エコー

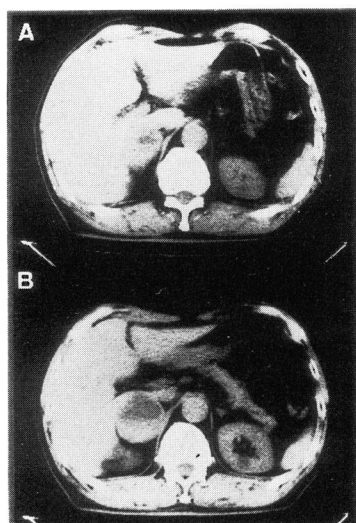


Fig. 3-A, B. CT scan

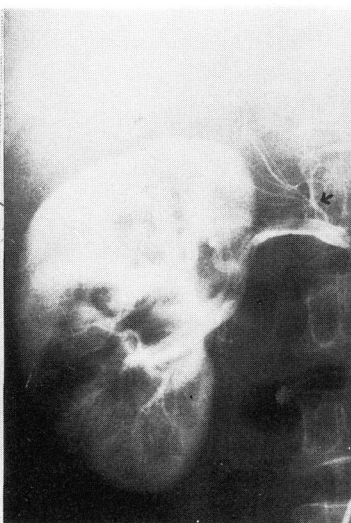


Fig. 4. 右腎動脈造影動脈相

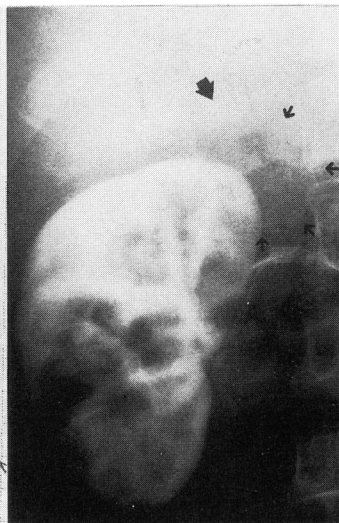


Fig. 5. 右腎動脈造影実質相

実質相では小矢印の部に非常に淡い円形の濃染像がみられ、この腫瘤の上方大矢印の所に一部濃く染まる部位を認めた (Fig. 5)。

以上の結果から、嚢胞状変化を伴った副腎腫瘍と診断し、1986年10月15日、全麻下にて手術を施行した。

手術所見: 横切開を行った。右副腎皮質は cystic に腫大した腫瘍により圧迫されていた。腫瘍と周囲との癒着は認めなかったが、剥離操作中血圧が 260/100 mmHg まで上昇した。この時の血中 adrenaline, noradrenaline はそれぞれ、1.06 ng/ml, 24.00 ng/ml と高値を示していた。しかし、phentolamine 静注, nifedipine 鼻腔内注入により、血圧は急速に 120/70 mmHg まで下がった。

摘除標本: 大きさ 5×5×4 cm, 表面平滑、ほぼ球形を呈しており、剖面では壊死組織を含んでいた (Fig. 6)。内容液は褐色漿液性で、出血と一部壊死組織を混じたものと推定された。摘出腫瘍内 catecholamine 含量は、adrenaline は 0.03 mg/g だが、noradrenaline は 4.90 mg/g と高値を示した。

病理組織学的所見: 腫瘍部のある部分では出血、壊死を伴いながら大小の裂隙を形成しそれが大きな pseudocyst の形成につながっている (Fig. 7)。腫瘍は血管の多い間質で囲まれた特徴的胞巣状構造を示し、腫瘍細胞は好酸性の豊富な胞体を持ち、その核は

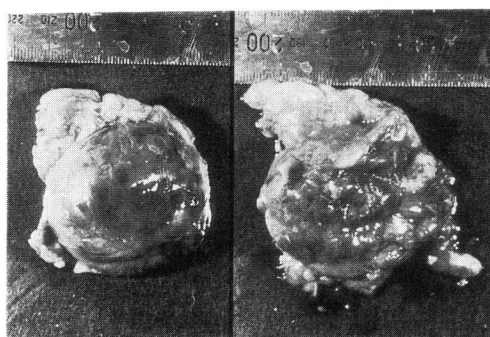


Fig. 6. 摘除標本

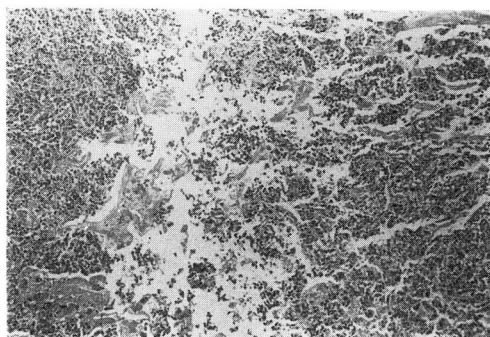


Fig. 7. 病理組織像 (×40)

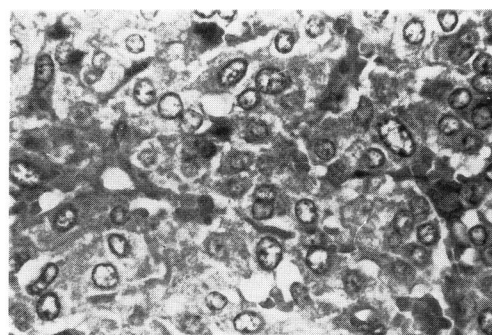


Fig. 8. 病理組織像 (×400)

円形で小型のものが多く、典型的な褐色細胞腫の所見を呈している。核型あるいは核クロマチンなどでは悪性の所見は認められない (Fig. 8)。このことから最終的に、pseudocystic pheochromocytoma と診断した。

術後経過: 術後高血圧発作はみられず、また catecholamine も正常化した。患者は現在外来にて経過観察中であるが、異常を認めていない。

## 考 察

副腎の cystic lesion は比較的稀な疾患であり、剖検例での頻度は報告者により、0.064%<sup>1)</sup> ないし 0.075%<sup>2)</sup> と報告されている。組織学的分類として Abeshouse ら<sup>3)</sup>、Foster ら<sup>4)</sup> の分類がある (Table 2)。なおこ

Table 2. Classification of adrenal cysts

Type	%
Parasitic cysts	7
Epithelial cysts	9
True glandular (retention) cysts	( 0 )
Embryonal cysts	( 2 )
Cystic adenomas	( 7 )
Endothelial cysts	45
Lymphangiomatous cysts	( 42 )
Angiomatous cysts	( 3 )
Pseudocysts	39
Hemorrhage within normal adrenal tissue	( 32 )
Hemorrhage within adrenal tumors	( 7 )

(Foster<sup>4</sup>, 1966)

これらの分類によると、cystadenoma 以外、副腎内に形成される空洞様変化を含めて簡易的に嚢腫として用い、出血や壊死を伴い二次的に形成されたものを偽嚢腫として一般的に表現されている。Mnaymneh ら<sup>5)</sup> は約250例を集計し endothelial cysts と pseudocysts が頻度的に最も多いと報告している。

Foster らの分類によると、本症例のように褐色細胞腫が出血や壊死などにより、裂隙、空洞を形成したものは pseudocysts に分類されている。本邦では1984

Table 3. 嚢胞状変化を伴った副腎褐色細胞腫  
本邦報告例

No.	報告者	発表	年齢	性	主訴・症状	患側	大きさ
1	大場 <sup>7)</sup>	1981	31	女	頭痛, 嘔吐, 高血圧, 体重減少	右	
2	中村 <sup>8)</sup>	1982	56	女	心窩部痛	右	16×10×8 cm
3	出口 <sup>9)</sup>	1982	48	女	発作性の後頭部拍動 性頭痛, 動悸, 高血圧	左	15×12×11 cm
4	高橋 <sup>10)</sup>	1983	27	男	四肢脱力感, 口渴, 多飲	左	4×5 cm
5	丸山 <sup>11)</sup>	1983	52	女	動悸発作, 頭痛, 耳鳴, 食後上腹部膨 満感	左	8.5×7.5×6.3 cm
6	山本 <sup>12)</sup>	1985	39	女	発熱, 左季肋部痛	左	9×7×6.5 cm
7*	横田 <sup>13)</sup>	1986	33	女		右 左	7.5×5 cm 5×3 cm
8	横田 <sup>13)</sup>	1986	59	男		右	12×12 cm
9	自験例	1987	64	男	右側腹部痛 肉眼的血尿	右	5×5×4 cm

\* Sipple症候群(両側性)

年に諸角ら<sup>6)</sup>が, 副腎に cystic lesion を形成した63例を集計しており, 本症例のように画像上嚢胞性変化を伴った副腎褐色細胞腫は, 調べ得た限り現在までに8例<sup>7-13)</sup>しか報告されていない (Table 3).

Pseudocysts は正常副腎内, あるいは褐色細胞腫のような病的副腎内に出血が起こり, 漏出, 液化, 吸収, 厚い線維壁の形成による包囲化を伴い形成されるとの説<sup>14)</sup>や, catecholamine は強力な血管収縮物質であり, これにより腫瘍の虚血, 出血, 壊死, さらに空洞形成を起こして形成される説もある<sup>15)</sup>. さらに Incze ら<sup>16)</sup>は, 電顕で検討した結果, pseudocysts は初めは endothelial cysts であり, これがおそらく外傷を受けたり繰り返す出血により, 嚢胞壁の内皮細胞の大部分が collagen に置換されてきたものと推定している.

臨床上, 褐色細胞腫は一般的に catecholamine の分泌により高血圧症を呈するが, 本症例は術前に尿中 normetanephrine が高値を示していたにもかかわらず高血圧を示さず, 手術中のみ昇圧を呈し, いわゆる無症候性褐色細胞腫の範疇に属するものと考えた. 褐色細胞腫が無症候性となる理由としては, 村山ら<sup>17)</sup>の指摘するように, 1) いわゆる発作型であり, 平常は腫瘍からの catecholamine (CA) の分泌がなく, その結果, 非発作時の血中, 尿中 CA 濃度が正常な場合, 2) CA 分泌機構の異常により通常の分泌刺激では腫瘍から CA が分泌されない場合, 3) DOPA, *d*-nor-adrenaline などの不活性 CA が分泌されている場合, 4) 抱合, 分解, 再摂取などの腫瘍内外での CA

の不活性化が亢進し, その結果, 血中での CA が低値を示す場合, 5) CA に対し血管が不応になっている場合, 6) kallikrein, prostaglandin-E など CA 阻害物質が多量に分泌され, その結果 CA に対し不応になっている場合, が考えられている. 本症例において, 血管造影時の強いストレスで昇圧せず, 術中腫瘍剝離操作中, CA が分泌され昇圧を示しており, 上記 2) の原因が考えられる.

血尿は術後消失したが, 腫瘍との因果関係は不明である. 寺地ら<sup>18)</sup>は血尿を呈した副腎の cystic lesion を集計したが, 組織型や腫瘍の大きさとの明らかな関連を認めていない. しかし本症例において, 術前の DIP で右腎の下方偏位を認めていることより, 腎血行障害による腎うっ血, あるいは尿管が屈曲して通過障害を起こして腎内圧が突然上昇することにより, 起こる症状ではないかと考えられた.

1980年に Falappa ら<sup>19)</sup>が, pseudocystic pheochromocytoma の CT 所見を報告しているが, 一般的に超音波検査や CT の普及により, 偶然に副腎の cystic lesion が発見される症例も少なくない. 本症例では施行しなかったが, 嚢胞状副腎腫瘍の術前診断法として, 経皮的穿刺吸引による内容液の内分泌学的検査も有用であると考えられる<sup>20)</sup>.

## 結 語

本邦第9例目と思われる, 嚢胞状変化を伴った副腎褐色細胞腫の1例を報告するとともに, 若干の考察を加え検討した.

本論文の要旨は, 第118回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した.

## 文 献

- 1) Wahl HR: Adrenal cysts. *Am J Pathol* **27**: 758, 1951
- 2) Budd DC and Fink DL: Cysts of the adrenal gland. *The American Surgeon*, Oct, 649-652, 1979
- 3) Abeshouse GA, Goldstein RB and Abeshouse BS: Adrenal cysts: review of the literature and report of three cases. *J Urol* **81**: 711-719, 1959
- 4) Foster DG: Adrenal cysts: review of literature and report of case. *Arch Surg* **92**: 131-143, 1966
- 5) Ghandur-Mnaimneh L, Slim M and Muakassa K: Adrenal cysts: pathogenesis and histological identification with a report of 6 cases. *J Urol* **122**: 87-91, 1979
- 6) 諸角誠人, 高橋茂喜, 宮崎尚文, 川地義雄, 引地

- 功侃, 小川由英, 北川龍一: 副腎嚢腫の1例. 泌尿紀要 **30**: 907-911, 1984
- 7) 大場みどり, 柴田哲男, 太田博郷, 浜野博次, 林秀晴, 深谷哲昭, 大久保満, 佐々寛己, 丹羽豊郎, 松井永二: 褐色細胞腫の2治験例, そのCT所見. 日内会誌 **70**: 104, 1981
- 8) 中村 薫, 建野正毅, 佐々木哲二, 矢倉 晃, 王鉄城, 伊藤秀夫: 巨大な嚢腫を呈した副腎褐色細胞腫の1例. 日臨外会誌 **43**: 335, 1982
- 9) 出口不二夫, 周 妙珍, 片桐 誠, 吉田勝也, 杉山吉克, 斎藤俊弘, 小川道一, 稲垣義明, 島崎淳, 伊藤晴夫: 嚢腫を伴った褐色細胞腫の1例. 日内会誌 **71**: 93, 1982
- 10) 高橋 晶, 久保善明, 川村光信, 林 洋, 松島照彦, 宮崎 滋, 片岡亮平, 内藤周幸, 保坂義雄, 堀内誠三: 嚢腫を形成した副腎褐色細胞腫の1例. 内科 **52**: 1155-1157, 1983
- 11) 丸山 徹, 亀田志郎, 草場公宏, 岡村精一, 石松豊洋: 巨大嚢腫を形成した副腎褐色細胞腫の1例. 西日泌尿 **45**: 615-618, 1983
- 12) 山本 正, 中村 薫, 白水 幹, 木村 哲, 池内駿之: 興味ある褐色細胞腫の2例. 泌尿紀要 **31**: 1427-1432, 1985
- 13) 槇田宣江, 森 正樹, 伊藤祥子, 伊藤勝陽, 大本俊文, 辻 修一, 斎藤知子, 勝田静知: 褐色細胞腫の画像診断. 臨床放射線 **31**: 281-286, 1986
- 14) Kearney GP and Mahoney EM: Adrenal cysts. Urol Clin North Am **4**: 273-283, 1977
- 15) 佐藤辰男, 小野磐夫, 三浦幸雄, 阿部圭志, 吉永馨: 高血圧とカテコールアミン. 総合臨床 **20**: 1233-1244, 1971
- 16) Incze JS, Lui PS, Merriam JC, Austen G, Widrich WC and Gerzof SG: Morphology and pathogenesis of adrenal cysts. Am J Pathol **95**: 423-432, 1979
- 17) 村山耕子, 川井紘一, 葛谷信明, 板倉光夫, 藤田敏郎, 小出義信, 山下亀次郎, 加納勝利, 小磯謙吉: 高血圧を示さなかった褐色細胞腫の1例. ホルモンと臨床(増刊症例特集) **34**: 306-309, 1986
- 18) 寺地敏郎, 寺井章人, 町田修三, 大森孝平: 副腎嚢腫の2例. 泌尿紀要 **32**: 1497-1503, 1986
- 19) Falappa P, Mirk P, Rossi M, Troncone L, Butti A and Colagrande C: Bilateral pseudocystic pheochromocytoma. J Comput Assist Tomogr **4**: 860-862, 1980
- 20) Bush WH, Elder JS, Crane RE and Wales LR: Cystic pheochromocytoma. Urology **25**: 332-334, 1985

(1987年7月3日受付)